

要 旨

先天性正中鼻瘻孔は外鼻の正中部に開口する皮膚瘻孔であり、臨床的には、鼻背部の炎症を繰り返す腫瘍としてみられることが多い。

原因として、胎生期の顔面形成過程で上皮が迷入することで生じるとされており、通常瘻孔は嚢腫に連なり鼻骨付近で終わるものが多いが、瘻孔が篩骨洞、前頭洞、頭蓋底に達する症例も報告されている。

症例1は47歳女性、症例2は1歳男児。いずれも生後まもなく鼻背中央部に小孔を認めた。2例とも全身麻酔下に鼻部正中縦切開で瘻孔の完全摘出術を施行した。両症例とも瘻孔は正中上方へ進み、瘻孔先端は鼻骨表面に達していた。病理組織所見で瘻孔内壁は重層扁平上皮に覆われ、皮膚付属器を認めた。

いずれも手術により良好な結果を得たので、文献的考察を加えて報告する。

キーワード：正中鼻瘻孔、鼻疾患、嚢腫

はじめに

外鼻の先天性形態異常の報告は、他の頭頸部領域における先天性形態異常の報告と較べると稀であると考えられている。先天性正中鼻瘻孔は外鼻に生じる先天性形態異常であり、本邦では1948年、武田の報告以来、検索した限り32例の報告がある。

今回、先天性正中鼻瘻孔の2症例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例1：47歳、女性。

主 訴：鼻背部腫脹。

家族歴：特記することなし。

既往歴：特記することなし。

現病歴：出生時から鼻背部正中に瘻孔が存在し、時に瘻孔から分泌液の排出を認めていた。

現 症：鼻背部正中に瘻孔を1カ所認める（図1）。

術前 CT：腫瘍像ははっきりしない。鼻骨骨欠損はない。頭蓋底の骨形態異常もない。

術前 MRI：腫瘍像ははっきりしない（図2、3）。

経 過：全身麻酔下に鼻部正中縦切開で瘻孔を摘出し



図1 初診時

た。瘻孔最深部は鼻骨表面と接していた（図4、5）。術後の経過は良好である。術後4年経過したが、再発はない（図6）。

病理組織学的所見：瘻孔壁は重層扁平上皮で取り囲ま

れており，皮下組織には汗腺，皮脂腺，毛嚢などの皮膚付属器を認める（図7）．

症例2：1歳，男児．

主 訴：鼻背部の皮下腫瘍．

家族歴：特記することなし．

既往歴：在胎35週3日，出生時体重2,264g，Apgar 8

点で出生した．

現病歴：出生時から鼻背部正中に皮膚瘻孔あり．

現 症：鼻背部正中に瘻孔を1ヵ所認める．

検 査：術前のCT検査とMRI検査は行っていない．

経 過：全身麻酔下に鼻部正中縦切開で瘻孔及び嚢腫を摘出した（図8）．嚢腫最深部は鼻骨表面と接してい

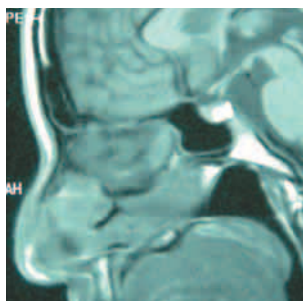


図2 T1強調像

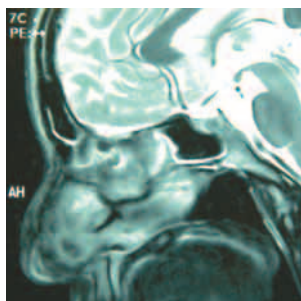


図3 T2強調像

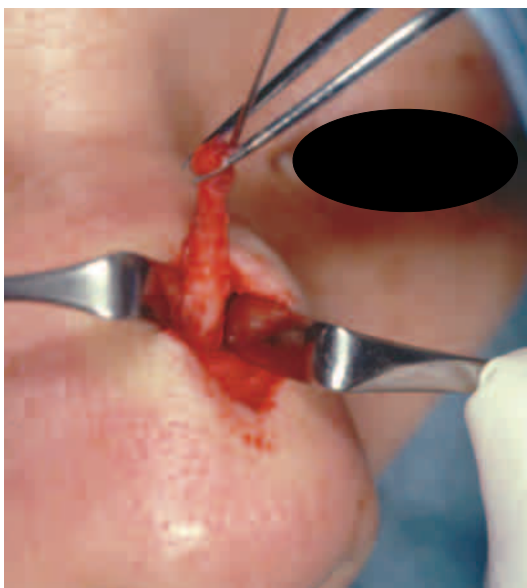


図4 術中所見

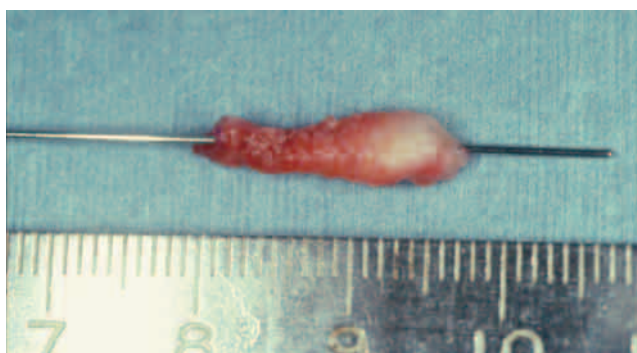


図5 摘出標本



図6 術後1ヵ月時所見

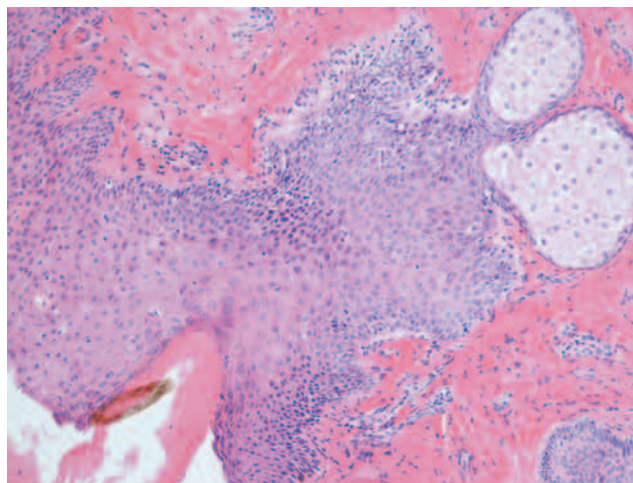


図7 組織学的所見（×100）

た。術後1年4ヵ月経過したが、局所再発はない（図9）。

病理組織学的所見：瘻孔壁は異型のない重層扁平上皮に覆われ、皮膚付属器を認めた。内容に毛を含んでいた（図10）。

考 察

先天性正中鼻瘻孔は外鼻の先天性形態異常であり、我々が検索した限り、本邦では自験例を加えると34例の報告がある^{1)~25)}。



図8 手術デザイン



図9 術後4ヵ月時所見

本症は先天性耳前瘻孔と同様に、出生時は小孔として認められるだけで、炎症症状が出現して初めて病院を受診し、治療を受けていることが多い。また本症は鼻部の感染性紛瘤などの診断名で治療を受けていることも多いと思われ、実際の症例数は報告症例数よりずっと多いのではないかと推測される。

成因として、胎生期の顔面形成過程において上皮が迷入することで生じるとされている。現在、胎生5～8週の外鼻形成期に内側鼻隆起の癒合不全で発生する顔面起源説と、前神経孔の閉鎖不全により脳硬膜周囲の結合組織が残存し発生する頭蓋起源説の2説が代表的である。

本邦の34報告例において、性別は男性22例、女性11例、不明1例であった。初診年齢は出生時から73歳まで幅広くみられるが、本症が感染を起こさない限り無症状であることが原因であると考えられる。

瘻孔の存在部位は鼻背部が25例と最も多く、続いて鼻尖部4例、鼻柱部2例、内側隆起部1例の順であった。

鼻背部の瘻孔や鼻背部の発赤、腫脹を繰り返すという病歴から診断は比較的容易である。しかし本邦の報告では、病変の最深部が鼻骨下に達するものが32例中15例に存在し、病変の頭蓋内進展を認める症例も3例報告されている^{18), 19), 24)}ため、術前のCT検査による骨欠損の有無やMRI検査による病変の進展範囲の確認が必要であると思われる。

治療は手術療法が原則であり、不完全な手術や切開術では再発を起こすため、瘻孔、瘻管、囊腫の完全摘

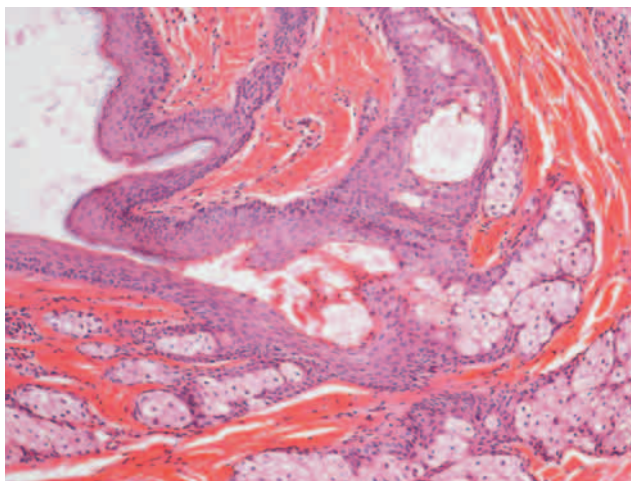


図10 組織学的所見（×100）

出を必要とする。

皮膚の切開方法としては、鼻部正中縦切開、横切開、V切開、U切開、S状切開などの報告がある。われわれは過去の報告から、瘻孔が正中頭側方向に向かって走行する頻度が高いことに注目し、鼻部正中縦切開を選択して良好な結果を得た。この方法であれば、嚢腫が大きい場合や、鼻骨切除が必要な場合でも十分対応でき、術後の瘢痕も目立ちにくいと思われる。

ま と め

先天性正中鼻瘻孔の2症例を経験した。全身麻酔下に鼻部正中縦切開で瘻孔の完全摘出を施行し、経過は良好である。

文 献

- 1) 武田博文：稀有なる鼻橋部瘻孔の1例。耳喉 20：29-31, 1948
- 2) 河野康雄，小田雅義：先天性鼻瘻孔の1例。日耳鼻 66：1575, 1963 (抄録)
- 3) 長谷部英雄，平野 実，牧本一男：正中鼻瘻孔の1例。耳鼻臨 56：175-178, 1963
- 4) 設楽敏明，大前 二：正中鼻瘻孔の1例。日耳鼻 67：1799, 1964 (抄録)
- 5) 立石 厚：〔松村哲夫，宮原敏行：先天性鼻瘻孔の1症例。日耳鼻 67：1479, 1964 (抄録)〕から引用
- 6) 西井竜雄，吉浦禎二：外傷のため診断を誤った鼻瘻孔の1例。日耳鼻 68：698, 1965 (抄録)
- 7) 宮原敏行，牧島和見：先天性正中鼻瘻孔について。耳鼻 41：173-180, 1969
- 8) 星野知之，山田文則，福田 修：正中鼻瘻孔3例。日耳鼻 74：775-780, 1971
- 9) 前興 治，大森喜太郎，大森清一：外鼻皮様嚢腫の治験例。形成外科 7：256-261, 1974
- 10) 春山喜一，飯沼寿孝，三谷真理子：先天性正中鼻瘻孔の1症例。耳鼻 51：615-620, 1979
- 11) 池田 公，柳田とも子：先天性正中鼻瘻孔の1症例。日耳鼻 84：445-446, 1979 (抄録)
- 12) 柳下邦夫，田辺俊英：鼻瘻孔。日皮会誌 90：1048-1049, 1980 (抄録)
- 13) 石井宏典：正中鼻瘻孔の1例。耳鼻臨 75：859-860, 1982 (抄録)
- 14) 松田和也，平本道昭，木村 正，他：先天性正中鼻瘻孔の1例。倉中病院報 53：89-92, 1984
- 15) 前沢尚美，中村純次，久保英一，他：先天性正中鼻瘻孔(皮様嚢腫)の3例。日形会誌 11：78, 1991 (抄録)
- 16) 東久志夫：先天性正中鼻瘻孔の2例。皮膚臨床 30：1193-1196, 1988
- 17) 漆原克之，大塚 壽，新城 憲：正中鼻瘻孔-1治験例と本邦報告例の集計-。愛媛医学 11：327-332, 1992
- 18) 片橋立秋，花沢豊行，今野昭義，他：前頭蓋底に達する先天性鼻瘻孔の1症例。耳鼻頭喉 64：501-505, 1992
- 19) 村上順子，村上 裕，立木 孝，他：脳硬膜に達する正中鼻瘻孔の1例。耳鼻 41：889-895, 1995
- 20) 内田 寛：正中鼻瘻孔。皮膚病診療 17：653-656, 1995
- 21) 白壁理志，田嶋定夫，上田晃一，他：正中鼻瘻孔の1例。形成外科 40：195-198, 1997
- 22) 飯田直成，守屋修二，宇田川晃一，他：正中鼻瘻孔を伴った前頭・鼻異形成症の1例。形成外科 41：565-569, 1998
- 23) 市田祐之，梁井 皎，大関康磨，他：先天性鼻瘻孔の1例。形成外科 45：961-965, 2002
- 24) 中野知明，愛場庸雅，鶴山太一，他：9p-症候群に伴った先天性正中鼻瘻孔の1例。日耳鼻 105：29-32, 2002
- 25) 太田 康，松本 有，市村恵一，他：正中鼻瘻孔の1症例。日鼻誌 42：325-328, 2003

Two Cases of Congenital Median Nasal Fistula

Kei INATSUGI, Hiroaki NAGAE

Division of Plastic Surgery, Tokushima Red Cross Hospital

Congenital median nasal fistula is a skin fistula which opens in the median area of the external nose. Clinically, this disease is often seen in the form of mass of the dorsum nasi which repeats cycles of inflammation and remission.

This disease is thought to occur as a result of aberration of the epithelium during the course of intrauterine face formation.

Usually, the fistula leads to cystoma and ends in the vicinity of the nasal bone. However, cases of this fistula spreading to the ethmoid sinus, frontal sinus or skull base have also been reported.

Of the cases encountered at our department, one was a 47-year-old woman and the other was a one-year-old boy. Both were found to have a small opening in the center of dorsum nasi immediately after birth. Both patients underwent complete resection of the fistula with a median longitudinal incision under general anesthesia. In both cases, the fistula was directed upwards in the median region, with the tip reaching the surface of the nasal bone. Histopathologically, the inner wall of the fistula was found to be covered with stratified squamous epithelium and had appendages of the skin.

Both cases responded well to surgery. These cases will be presented, with reference to the literature.

Key words: congenital median nasal fistula, nose disease, cyst

Tokushima Red Cross Hospital Medical Journal 12:117–121, 2007
